

Manejo e prognóstico da gastrosquise em uma maternidade pública no estado de Sergipe

Management and prognosis of gastroschisis in a public maternity hospital in the state of Sergipe

Manejo y pronóstico de la gastrosquisis en una maternidad pública del estado de Sergipe

Recebido: 23/11/2022 | Revisado: 05/12/2022 | Aceitado: 06/12/2022 | Publicado: 15/12/2022

Fernanda Lodysllen Costa Silva

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1403-2463>

Universidade Federal de Sergipe, Brasil

E-mail: en.llydolinda@hotmail.com

Marcia Virgínia Pereira Montalvão

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3278-5706>

Universidade Federal de Sergipe, Brasil

E-mail: masrcia.mmontalvao@gmail.com

Simone Maria de Oliveira

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8211-6100>

Universidade Federal de Sergipe, Brasil

E-mail: simonecirped@yahoo.com.br

Resumo

A gastrosquise é a anomalia congênita mais comum da parede abdominal, definida como um defeito do seu fechamento, resultando em evisceração de estruturas intra-abdominais. Aparece, frequentemente, isolada, sem associação a outras anomalias. Em diferentes regiões do Brasil e do mundo, tem ocorrido um aumento de incidência dessa patologia - atualmente entre 2 a 5 por 10.000 nascidos vivos - configurando-se um problema de saúde pública a ser equacionado. O presente estudo objetivou analisar o perfil dos nascimentos e óbitos por gastrosquise, identificar as causas de mortalidade intra-hospitalares e as ocorrências de complicações pós-operatórias de RN com gastrosquise, em uma maternidade pública no estado de Sergipe. Trata-se de um estudo prospectivo observacional de coorte, alinhado ao estudo multicêntrico 'PAEDSURG' em que todos os hospitais brasileiros seriam elegíveis para participar. Os dados foram coletados entre 15/11/2021 e 15/11/2022, de todos os casos consecutivamente elegíveis, sob a supervisão da cirurgiã pediátrica coordenadora local da pesquisa, Dr^a Marcia Montalvão. Foram descritos 5 casos de RN com gastrosquise, todos nascido por cesárea, a prematuridade foi vista em 4 casos (mediana de IG 35 semanas), sendo o peso baixo ao nascimento observado em 75% dos casos (mediana de 2180g). Todas as mães eram primigestas, todas fizeram pré-natal e realizaram exame ultrassonográfico, evidenciando gastrosquise em 4 RN, 3 mães tinham baixa idade materna (mediana de 18 anos), nenhuma com nível superior. A taxa de mortalidade foi baixa (dos 5 RN, apenas 1 veio a óbito) e fatores socioeconômicos se mostraram associados à ocorrência de gastrosquise.

Palavras-chave: Gastrosquise; Anomalias congênitas; Pré-natal; Prognóstico.

Abstract

Gastroschisis is the most common congenital anomaly of the abdominal wall, defined as a defect in its closure, resulting in evisceration of intra-abdominal structures. It often appears isolated, without association with other anomalies. In different regions of Brazil and the world, there has been an increase in the incidence of this pathology - currently between 2 and 5 per 10,000 live births - configuring a public health problem to be equated. The present study aimed to analyze the profile of births and deaths due to gastroschisis, to identify the causes of in-hospital mortality and the occurrences of postoperative complications of newborns with gastroschisis, in a public maternity hospital in the state of Sergipe. This is a prospective observational cohort study, aligned with the multicenter study 'PAEDSURG' in which all Brazilian hospitals would be eligible to participate. Data were collected between 11/15/2021 and 11/15/2022, from all consecutively eligible cases, under the supervision of the pediatric surgeon coordinating the research site, Dr^a Marcia Montalvão. Five cases of newborns with gastroschisis were described, all born by cesarean section, prematurity was seen in 4 cases (median GA 35 weeks), with low birth weight observed in 75% of cases (median 2180g). All mothers were primiparous, all had prenatal care and underwent an ultrasound examination, showing gastroschisis in 4 NBs, 3 mothers had low maternal age (median of 18 years), none with higher education. The mortality rate was low (of the 5 NBs, only 1 died) and socioeconomic factors were associated with the occurrence of gastroschisis.

Keywords: Gastroschisis; Congenital abnormalities; Prenatal care; Prognosis.

Resumen

La gastrosquisis es la anomalía congénita más común de la pared abdominal, definida como un defecto en su cierre, que resulta en la evisceración de las estructuras intraabdominales. A menudo aparece aislado, sin asociación con otras anomalías. En diferentes regiones de Brasil y del mundo, ha habido un aumento en la incidencia de esta patología - actualmente entre 2 y 5 por 10.000 nacidos vivos - configurando un problema de salud pública a equiparar. El presente estudio tuvo como objetivo analizar el perfil de nacimientos y muertes por gastrosquisis, identificar las causas de mortalidad intrahospitalaria y la ocurrencia de complicaciones postoperatorias de recién nacidos con gastrosquisis, en una maternidad pública del estado de Sergipe. Este es un estudio de cohorte observacional prospectivo, alineado con el estudio multicéntrico 'PAEDSURG' en el que todos los hospitales brasileños serían elegibles para participar. Los datos fueron recolectados entre el 15/11/2021 y el 15/11/2022, de todos los casos elegibles consecutivamente, bajo la supervisión de la cirujana pediátrica coordinadora del sitio de investigación, Dra. Marcia Montalvão. Se describieron cinco casos de recién nacidos con gastrosquisis, todos nacidos por cesárea, se observó prematuridad en 4 casos (mediana de EG 35 semanas), observándose bajo peso al nacer en el 75% de los casos (mediana 2180g). Todas las madres eran primíparas, todas tenían control prenatal y se les realizó un examen de ultrasonido, mostrando gastrosquisis en 4 RN, 3 madres tenían baja edad materna (mediana de 18 años), ninguna con educación superior. La tasa de mortalidad fue baja (de los 5 RN, solo 1 murió) y los factores socioeconómicos se asociaron con la aparición de gastrosquisis.

Palabras clave: Gastrosquisis; Anomalías congénitas; Atención prenatal; Pronóstico.

1. Introdução

O estudo das malformações congênitas (MC) é importante para o planejamento de políticas públicas desenvolvidas em prol da saúde da criança, alinhadas à incorporação de novas tecnologias, com vistas à redução da mortalidade infantil e melhoria de sua qualidade de vida. Embora as MC apresentem prevenção questionável, por conta de sua complexa causalidade, algumas são compatíveis com a vida, sendo um direito da criança que lhe sejam garantidos os princípios de universalidade, integralidade e equidade do Sistema Único de Saúde (SUS). Pesquisadores observaram que, no Brasil, houve uma redução da taxa de mortalidade infantil por outras causas, porém as malformações congênitas tornaram-se proporcionalmente mais frequentes (Luquetti & Koifman, 2011), sendo a gastrosquise o defeito de parede abdominal com maior frequência, com incidência variando de 2 a 5 por 10 mil nascidos vivos (Castilla et al., 2008).

Gastrosquise é um defeito paraumbilical de espessura total da parede abdominal, geralmente relacionado à evisceração do intestino e, às vezes, de outros órgãos abdominais, para a cavidade amniótica. É de ocorrência rara, todavia, alçou destaque, nos últimos anos, por vários motivos, entre eles, o aumento gradativo e recente da sua incidência, sem esclarecimento adequado da causa (West et al., 1995) (Kirby et al., 2013) (Diyaolu et al., 2021), pelas divergências sobre sua patogênese, pela crescente habilidade e efetividade em diagnosticá-la ao início da gestação, pelas melhorias nas técnicas operatórias e pelos avanços no suporte nutricional no pós-operatório (Bhat et al., 2020).

Essa patologia é geralmente diagnosticada no pré-natal, e bebês com gastrosquise podem nascer a termo ou próximo do termo. Com a melhoria do atendimento neonatal e o desenvolvimento de novas técnicas cirúrgicas, nos grandes serviços de referências, a taxa de sobrevivência pós-natal de acometidos por gastrosquise é superior a 95%. Todavia, entre 10 a 18% dos casos irão apresentar gastrosquise complexa ao nascer (Bradnock et al., 2011).

Gastrosquise complexa (GC) é caracterizada por presença de complicações das alças intestinais ao nascimento, como: perfuração, necrose, atresia, estenose ou vólculo. Pacientes com gastrosquise complexa apresentam maior morbidade. Do mesmo modo, a mortalidade na gastrosquise complexa é 3,6 vezes maior que na gastrosquise simples (18% vs. 5%) (Lap et al., 2016). O maior tempo de internação hospitalar e maior probabilidade de alta hospitalar com alimentação por nutrição parenteral intermitente e/ou sonda enteral está relacionada com os casos em que há perda significativa das alças intestinais, os quais podem evoluir para síndrome do intestino curto (SIC), quadro que exige maior tempo em nutrição parenteral e maior risco de falência hepática (Emil, 2018).

Este estudo está inserido em um projeto colaborativo multicêntrico exclusivamente brasileiro com o objetivo de investigar as anomalias congênitas cirúrgicas mais frequentes: Atresia de Esôfago, Hérnia diafragmática Congênita, Atresia

Intestinal, Gastrosquise, Onfalocele, Malformação Anorretal e Doença de Hirschsprung. Esse projeto foi baseado e inspirado no trabalho “Global PaedSurg Research Collaboration”, desenvolvido e executado pelo Kings College research center, que obteve baixa aderência dos centros brasileiros. Assim, o projeto brasileiro foi incentivado e autorizado pela investigadora principal Ms. Naomi Wright, recebendo a denominação “PaedSurg Brazil”, bem como a chancela do grupo de pesquisa GICS - Global Initiative Children's Surgery.

As anomalias congênitas estudadas pelo projeto possuem incidência entre 1/2000 e 1/5000 nascidos vivos e normalmente requerem atendimento cirúrgico de emergência nos primeiros dias de vida, podendo ser responsáveis por até 40% das cirurgias neonatais. Essas anomalias interferem na qualidade de vida da criança e na sua adaptação à sociedade.

Segundo a Organização Pan-Americana da Saúde (OPAS), as anomalias congênitas possuem mortalidade superior a 50% e são a segunda principal causa de mortalidade neonatal e infantil no mundo, atrás apenas da prematuridade. Nas Américas, aproximadamente uma em cada dez mortes de crianças com menos de cinco anos se deve a essas anomalias e, na América Latina, um em cada cinco bebês morrem de anomalias congênitas durante os primeiros 28 dias de vida.

Entretanto, no Brasil, há escassez de informações acerca dessas condições. O Paedsurg Brasil tem como propósito estudar as anomalias congênitas para que possamos conhecer nossa realidade e, conseqüentemente, ajudar na implementação de medidas para maior sobrevida e melhor qualidade de vida dessas crianças.

São extremamente controversos na literatura mundial os fatores prognósticos em gastrosquise, justificando o interesse em pesquisar sobre essa patologia. A descoberta de novos parâmetros de acompanhamento ou diagnósticos podem contribuir para a melhora da sobrevida de muitos pacientes não nascidos, modificando sua evolução.

2. Metodologia

Trata-se de um Estudo prospectivo observacional de coorte (Severino, 2017), o qual foi implementado na Maternidade Nossa Senhora de Lourdes e alinhado ao estudo multicêntrico ‘PAEDSURG’ (<https://www.paedsurgbrazil.com/>), em que todos os hospitais brasileiros seriam elegíveis para participar.

Os dados foram coletados de todos os casos consecutivamente elegíveis, dentro da maternidade, conforme a sua ocorrência. A coleta foi realizada sob a supervisão da cirurgiã pediátrica coordenadora local da pesquisa, Dr^a Márcia Montalvão. O período de coleta de dados ocorreu entre 15/11/2021 e 15/11/2022.

O trabalho foi protocolado na Plataforma Brasil e autorizado pelo Comitê de Ética, sob CAAE: 44591421620075546.

O presente estudo seguiu as normas do Conselho Nacional de Ética em Pesquisa (CONEP), que dispõe sobre as diretrizes e normas regulamentadoras de pesquisas envolvendo seres humanos. A participação no estudo foi voluntária, mediante concordância e assinatura do Termo de Consentimento Livre e Esclarecido dos responsáveis legais pelo recém-nato. Foram garantidos a liberdade de participação e o direito de recusar-se a participar ou de retirar-se do estudo a qualquer momento e sem qualquer prejuízo ao tratamento ou represália.

Todos os cuidados éticos foram observados, no sentido de garantir a confidencialidade das informações e anonimato dos participantes do estudo no momento da apresentação dos resultados e sua discussão.

No decorrer do ano de 2022, os responsáveis legais pelos recém-nascidos portadores da patologia ‘GASTROSQUISE’ nascidos ou internados na maternidade foram convidados a participar do protocolo de pesquisa, através da assinatura de um termo de consentimento livre e esclarecido.

Foram coletados dados demográficos, cuidados pré-hospitalares, tempo desde o nascimento até a apresentação na maternidade, tempo da admissão até a intervenção primária, quadro clínico, informações relativas à cirurgia realizada, complicações que ocorreram dentro de 30 dias da intervenção primária, incluindo: Infecção no local da cirúrgica, deiscência da

ferida operatória, síndrome compartimental, necessidade de reintervenção, tempo de permanência hospitalar, mortalidade, tempo de internação até a morte (em pacientes que não sobreviveram) e cuidados perioperatórios.

Os dados coletados foram armazenados em planilhas, resguardando o sigilo quanto à identificação dos pacientes. O estudo foi desenvolvido de acordo com protocolos nacionais e internacionais, além dos princípios básicos de proteção dos direitos e à dignidade dos seres humanos, conforme descrito na Declaração de Helsínquia (64ª Assembleia Fortaleza, Brasil, em outubro 2013) e de acordo com as legislações locais aplicáveis.

Eram elegíveis quaisquer recém-nascido ou lactente internado, atendidos, pela primeira vez, com gastrosquise. Isso incluiu, apenas, as crianças que não receberam, anteriormente, cirurgia para sua condição. As crianças que receberam os cuidados básicos de ressuscitação e suporte em um serviço de saúde diferente e que, depois, foram transferidas para a maternidade, também foram incluídas. Os pacientes que apresentaram a patologia em estudo, mas que receberam cuidados paliativos ou nenhum cuidado, foram incluídos no estudo, para refletir os resultados verdadeiros.

Foram excluídos os recém-nascidos ou lactentes com a condição do estudo que já tinham sido operados por sua condição. Somente os pacientes que se apresentaram pela primeira vez, dentro do período do estudo, foram incluídos.

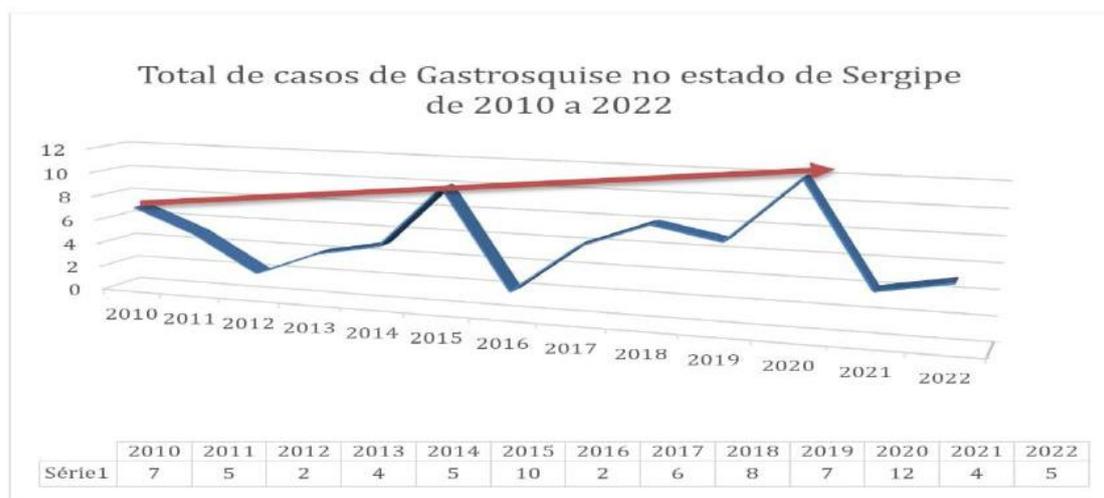
Dados disponíveis no banco de dados do DATASUS (<https://datasus.saude.gov.br/informacoes-de-saude-tabnet/>) e estatísticas vitais do SINASC sobre as anomalia ou defeitos congênitos em Nascidos Vivos (<http://tabnet.datasus.gov.br/cgi/deftohtm.exe?sinasc/Anomalias/anomabr.def>), do período decenal de 2010 a 2020 foram obtidos e tabulados, para fins de comparação.

A análise descritiva foi realizada através de frequências absolutas e relativas, para as variáveis categóricas, e por meio de medidas de tendência central e variabilidade, para as variáveis numéricas (Severino, 2017).

3. Resultados

De acordo com os dados obtidos no banco de dados do SINASC, no período de 2010 a 2020, acrescidos aos dados coletados no período de 2021 a 2022, o número total de casos registrados de RNs com gastrosquise, no estado de Sergipe, foi de 77 (Figura 1), sendo a capital, Aracaju, a cidade de residência do maior número de mães com RNs portadores da patologia estudada (Figura 2).

Figura 1 - Número total de casos de gastrosquise no estado de Sergipe, entre os anos 2010 e 2022.

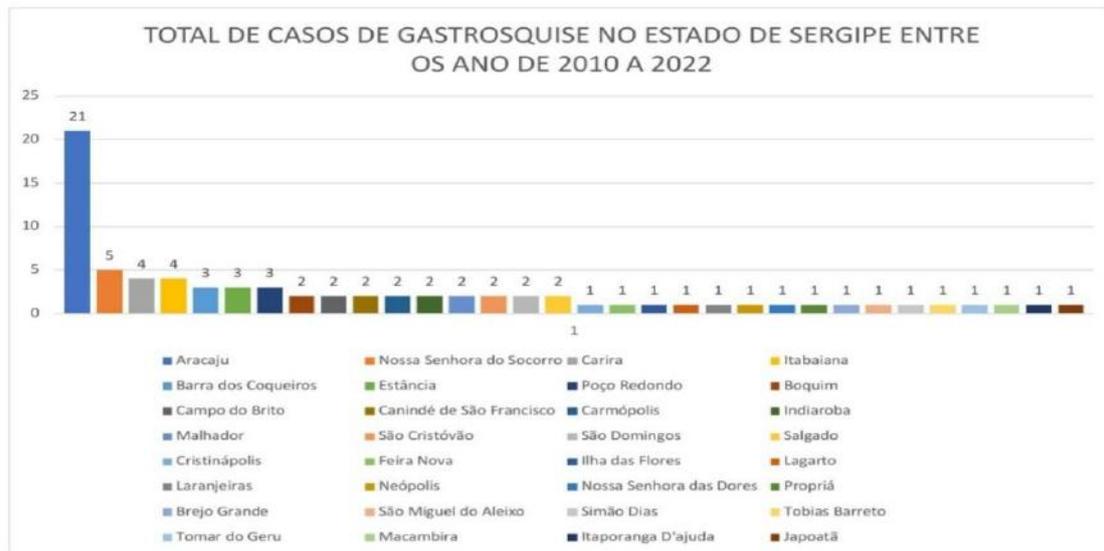


Fonte: Autoria própria.

O gráfico da Figura 1 sugere que, embora a apresentação dos casos sinalize a existência de picos esporádicos, parece haver uma curva de tendência ascendente.

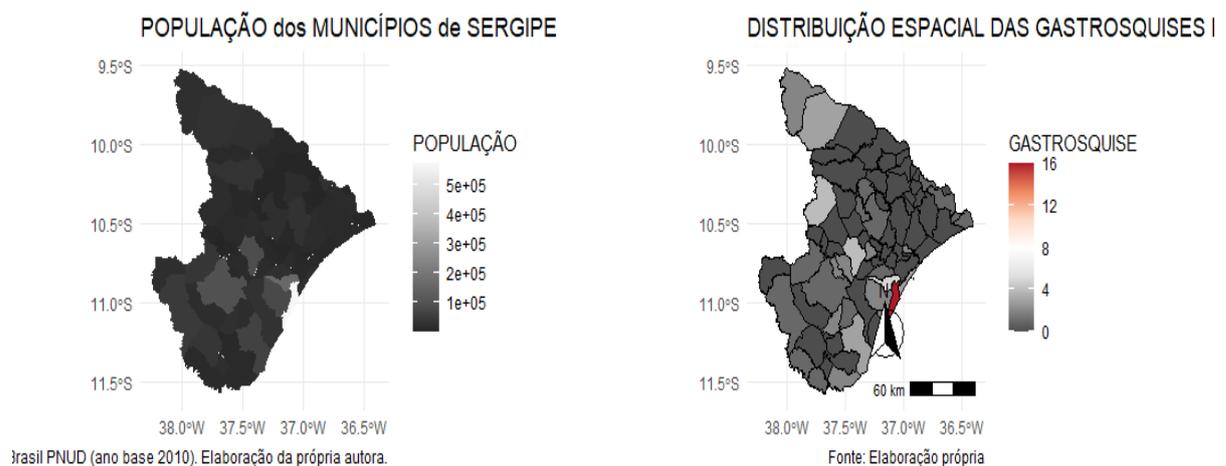
Quanto à distribuição espacial dos dados, no período de 2010 a 2022, observa-se a ocorrência de um reduzido número de casos na maioria dos municípios do estado, com concentração nas cidades mais populosas, especialmente a capital (Figuras 2 e 3).

Figura 2 - Distribuição por cidades dos casos de gastrosquise no estado de Sergipe entre os anos 2010 e 2022.



Fonte: Autoria própria.

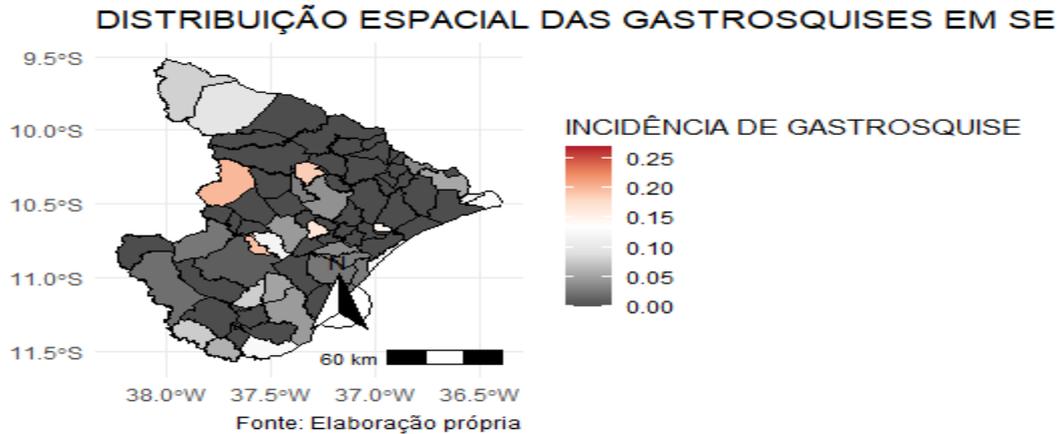
Figura 3 - Distribuição espacial dos casos de gastrosquise no estado de Sergipe, face à densidade populacional dos municípios do estado.



Fonte: Autoria própria.

Na Figura 3 é possível observar que os municípios de maior densidade populacional do estado (áreas claras do mapa à esquerda) originam o maior número de casos de gestantes portadoras de gastrosquise (áreas vermelhas e claras do gráfico à direita). Entretanto, se plotarmos a incidência de gastrosquise no período pelo número de habitantes do município, é possível observar que há uma concentração inesperada de casos em áreas pouco populosas, como é demonstrado no gráfico da (Figura 4) (áreas vermelhas e claras do gráfico):

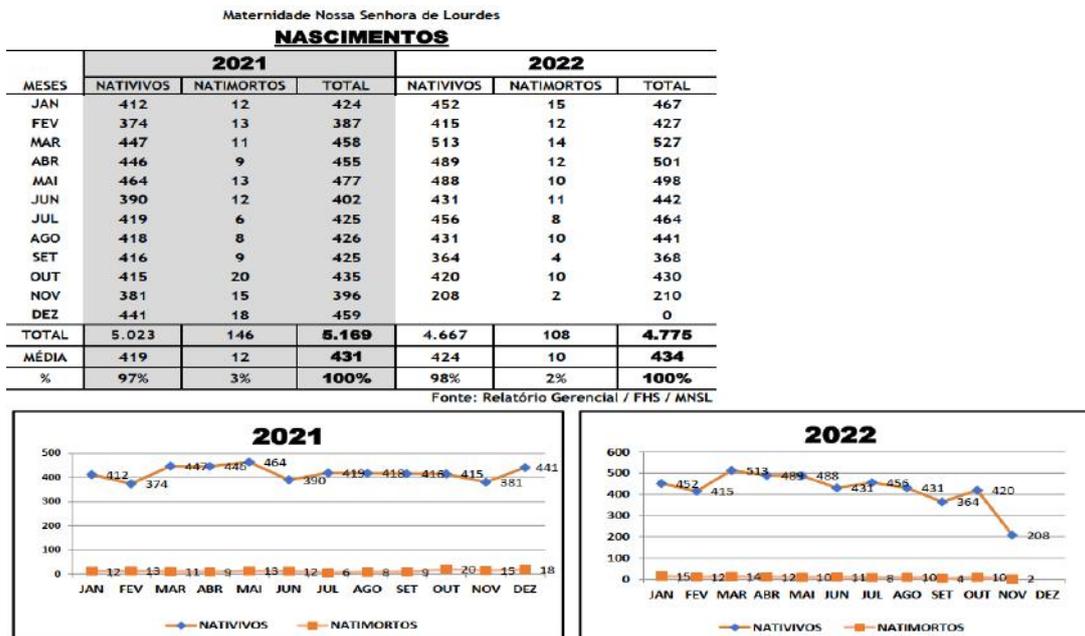
Figura 4 - Distribuição espacial dos casos de gastrosquise no estado de Sergipe, face à densidade populacional dos municípios do estado.



Fonte: Autoria própria.

No recorte de 1 ano estabelecido para o presente estudo, do período de 15 de novembro de 2021 a 15 de novembro de 2022, foram atendidos 5630 RN na MNSL, destes, 5489 nascidos vivos e 141 natimortos (Figura 5).

Figura 5 - Número total de nascidos vivos na Maternidade Nossa Senhora de Lourdes no período 15/11/2021 a 15/11/2022



Fonte: Relatório Gerencial/FHS/MNSL

Dos 5489 RNs estudados, cinco foram diagnosticados com gastrosquise (casos), resultando em uma incidência aproximadamente de 1 para cada 1097 nascimentos.

A tabela da (Figura 6) discrimina as principais características dos pacientes portadores de gastrosquise nascidos no período do estudo.

Figura 6 - Legenda: AIG: Adequado para idade Gestacional; PIG: Perímetro Cefálico; M: Masculino; F: Feminino; IG: Idade Gestacional; PC: Perímetro Cefálico; N: Não; AC: Anomalias Congênicas

Caso	Sexo	IG (Semanas)	Peso (g)	Comprimento (cm)	PC (cm)	Adequado Peso/IG	Outras AC Associadas	cAriótipo	Internação (dias)	história familiar de gastrosquise
Caso 1	M	33	2180	45	31,5	PIG	N	-	4	N
Caso 2	M	33	2030	43	30	PIG	N	-	31	N
Caso 3	F	39	3036	47	35,5	AIG	CIV PERIMEMBRANOSA	-	54	N
Caso 4	M	36	1944	-	-	PIG	N	-	10	N
Caso 5	F	35	2634	-	-	AIG	N	-	3	N

Fonte: Autoria própria.

Quatro dos cinco RNs com gastrosquise nasceram na MNSL – que é a maternidade de referência ao atendimento à gestante de alto risco do estado - e um nasceu na Maternidade Zacarias Júnior em Lagarto - SE.

Os cinco RNs foram operados pela equipe de cirurgia pediátrica e atendidos na UTI neonatal da MNSL. A taxa de mortalidade foi de 20%, (um óbito, dentre os cinco casos de RN com gastrosquise). A causa do óbito foi hipertensão pulmonar persistente e lesão renal aguda (LRA).

Os cinco casos ficaram internados com o período de internação variando de 4 a 54 dias.

A idade materna variou de 15 e 22 anos, sendo a mediana 18 anos. Três mães tinham menos de vinte anos de idade, uma com 20 anos e uma acima dessa faixa etária. As cinco mães eram primigestas. Nenhum caso foi natimorto ou aborto espontâneo.

As cinco mães não planejaram a gestação. Todas as mães fizeram uso de ácido fólico apenas durante a gestação. Sorologias para sífilis, hepatite B, hepatite C, toxoplasmose, rubéola e HIV foram negativas nas cinco mães. As cinco mães negaram uso tanto de tabaco quanto de álcool e de drogas ilícitas no período da gestação.

Dentre os fatores socioeconômicos, destacou-se a escolaridade: três apresentaram nível fundamental incompleto e duas Ensino Médio completo; não foi observada a formação em nível superior. Dos cinco casos, três eram do sexo masculino e dois do sexo feminino. A mediana de IG foi de 35 semanas (33 - 39 semanas) e quatro nascimentos foram pré-termo. A mediana de peso no nascimento foi de 2180g (1944g - 3036g), três RN nasceram com baixo peso.

Em relação à ocorrência de outras MC associadas, verificou-se a presença de mais de uma MC em um dos casos. O caso que foi a óbito e não possuía MC associada. Nos cinco casos, a história familiar de MC foi negativa.

A gastrosquise foi diagnosticada no pré-natal em quatro casos (80% dos casos), destes nenhum realizou acompanhamento pré-natal na MNSL. Em nenhum dos cinco casos havia descrição com relação à lateralidade do defeito. Gastrosquise complexa foi observada em um dos cinco RNs (Estenose intestinal).

A via de parto foi cesárea em 100% dos casos. Anomalias associadas foram encontradas em um RN malformações do sistema cardiovascular (CIV perimembranosa).

Nenhuma medida de PIA foi realizada no transoperatório dos cinco casos descritos. O Fechamento primário foi realizado com sucesso em quatro pacientes (80%) destes, três RNs (60%) necessitaram de reabordagem por complicações pós-operatórias, como perfuração de alças, necrose intestinal, síndrome compartimental, realização ou fechamento de ileostomias e enteroanastomoses ou correção de aderências. Em um RN, foi aplicado silo. Neste grupo, nenhum veio a óbito. Quanto aos órgãos eviscerados, 80% dos RNs apresentavam apenas alças intestinais expostas; 20% com estômago herniado.

A mediana do tempo para intervenção cirúrgica foi de 12 min, com um tempo máximo de 4h para realização da cirurgia. A mediana do tempo de ventilação mecânica foi de 10 dias. A Mediana do tempo de nutrição parenteral total (NPT) foi de 15 dias. A mediana do tempo de internação foi de 15 dias, com tempo máximo de internação de 54 dias. Os pacientes recebiam alta quando ganhavam peso e quando toleravam nutrição oral.

4. Discussão

A incidência de gastrosquise na Maternidade estudada foi de 1:1097 nascimento, cifras muito acima das encontradas nas diferentes regiões do Brasil e do mundo. Na década de 60, após a implantação de programas de coleta de dados e vigilância referentes a anomalias congênitas em vários países do mundo, a incidência era estimada em 1:50.000 nascimentos. Nas duas últimas décadas, foi observado um aumento desta taxa e, de acordo com os dados do Estudo Colaborativo Latino Americano de Malformações Congênitas (ECLAMC), a prevalência na América do Sul é de 2,9: 10.000 (Calcagnotto et al., 2013). Deve ser destacado que quatro dos 5 RNs nasceram na maternidade que atende gestantes de alto risco. Esse perfil especializado da instituição pode justificar a elevada incidência de casos atendidos.

Nossos achados estão compatíveis com a literatura mundial, em relação às características demográficas, menor idade materna, prematuridade, maior número de primigestas, baixo peso ao nascer (Centofanti et al., 2019) e evidenciaram uma média de idade gestacional de 35,82 semanas associada à gastrosquise.

Nosso estudo observou que a prematuridade foi vista em quatro RNs, com mediana de IG de 35 semanas e do peso de 2180g, sendo o peso baixo ao nascimento observado em três deles, sendo, em 2 casos, considerados adequados para idade. Há evidências de que a prematuridade e o baixo peso estão relacionados com a gastrosquise; nos grandes trabalhos publicados nas últimas décadas, a idade gestacional média foi de 36,2 semanas e o peso médio foi de 2400g (Hunter & Stevenson, 2008).

Foi observada a primiparidade nos cinco casos descritos. A primiparidade é outro fator associado à gastrosquise (Benjamin et al., 2009).

No presente estudo, em relação aos fatores socioeconômicos, foi observado que nenhuma das mães possuíam Ensino Superior, e que três possuíam Ensino Fundamental incompleto e duas Ensino Médio completo. Entre 2000 e 2004, em um estudo realizado no Brasil, evidenciou-se maior frequência de gastrosquise nos RNs de mães com pouco anos de estudo; observaram também que a prevalência entre as mulheres com menor escolaridade e as com 12 anos ou mais de estudo durante o período estudado aumentou, chegando em 2004 ao máximo que foi de 106,5: 10.000 (0-7 anos de estudo) e 60,8:10.000 (12 e mais anos de estudo) (Guerra et al., 2008). Em outro estudo, no estado da Califórnia, foi observada uma maior prevalência de gastrosquise em mães que não possuíam Ensino Médio Completo (Vu et al., 2008). Essa pode ser uma associação espúria, tendo como fator de confusão a baixa idade média das gestantes de bebês portadores dessa patologia.

Nesse quesito, os dados são conflitantes. (Centofanti et al., 2019) não observaram relação da gastrosquise com idade materna. Já outros autores, relataram que o percentual de mães menores de 20 anos é muito superior (42%) em comparação com o total de mães dos RNs com gastrosquise (15,2%), sendo a média de idade das mães de 21,6 anos, variando de 14 a 25 anos (Nazer Herrera et al., 2016). A baixa idade materna (<20 anos), parece ser um fator preditivo para o aparecimento dessa MC

(Feldkamp et al., 2008). No nosso estudo, obtivemos uma mediana de 18 anos (15 e 22 anos), ratificando os resultados destes autores.

A elevação da morbidade e mortalidade tem como fator de risco a complexidade da gastrosquise. O óbito em RN com gastrosquise está associado a algumas variáveis, sendo as principais: prematuridade, presença de infecções e baixo peso ao nascimento (Amorim et al., 2000). Observamos, em nosso estudo, que a causa do óbito foi hipertensão pulmonar persistente e lesão renal aguda (LRA), este paciente apresentou grave edema de alças, fator complicador de prognóstico.

Países desenvolvidos apresentam sobrevida acima de 90% e baixa taxa de mortalidade (Calcagnotto et al., 2013). Foi evidenciado, em um estudo sobre uma população do nordeste brasileiro, mortalidade de 53% dos casos de gastrosquise, relacionada a um acesso precário ao atendimento de saúde (Vilela et al., 2002). Nos casos que estudamos, a taxa de mortalidade foi de 20%, notadamente menor que a esperada para a região.

A associação de síndromes genéticas e anomalias congênitas graves à gastrosquise não é frequente, sendo observada em 6,8 % a 20% dos casos. Todavia, podem ocorrer outras MC locais, tais como estenoses intestinais e atresias. A incidência encontrada no presente estudo foi de 20%, sendo compatível com as relatadas pela literatura (Tabela 4). O aumento da sensibilidade de identificação de anomalias congênitas pode se dar através do uso do protocolo (Merks et al., 2003), da triagem ser realizada na maternidade, e do treinamento da equipe.

Em relação ao cariótipo, não encontramos no prontuário resultados. Em um estudo, foram observadas taxas elevadas de associação de gastrosquise com outras anomalias congênitas (em torno de 20% ou mais), tais como clinodactilia, holoprosencefalia, pé torto congênito, micrognatia, ausência unilateral da ulna e do rádio e aneuploidias. Esses achados sugerem que é prudente realizar uma ultrassonografia detalhada e análise de cariótipo em todos os casos, embora a gastrosquise seja menos frequentemente associada a outras MC (Poulain et al., 1994).

Em relação às alterações cromossômicas consideradas variantes da normalidade, no nosso estudo nenhum dos 5 RNs apresentaram. Alguns autores observaram associação positiva às anomalias congênitas inespecíficas, à leucemia, abortos, fertilidade reduzida, esquizofrenia (Jeong et al., 2010).

No presente estudo, todas as mães realizaram o pré-natal. Há uma discussão na literatura sobre o papel do pré-natal e sua influência sobre redução da taxa de mortalidade em RNs com gastrosquise. Em um estudo retrospectivo, os autores observaram que o desconhecimento desta anomalia congênita durante a gestação provavelmente resulta em ausência de cuidados específicos durante o parto, os quais têm como objetivo reduzir a contaminação da cavidade abdominal. Além disso, eles mostraram a relação entre a não realização de pré-natal e uma maior taxa de mortalidade, quando o pré-natal não é realizado de maneira adequada, o diagnóstico de gastrosquise não é feito, e não há um manejo adequado dos pacientes. Ainda nesse estudo, constataram que o conhecimento prévio da gastrosquise viabiliza a transferência materna para um centro de atenção terciária, possibilitando um melhor e mais adequado manejo em relação ao RN (Sbragia Neto et al., 1999).

5. Conclusão

A gastrosquise é uma patologia congênita caracterizada pela falha de fechamento da parede abdominal, cujo prognóstico é uma consequência direta da qualidade dos cuidados neonatais, sendo excelente, em países desenvolvidos.

Sua incidência tem se elevado, ao longo dos anos, e em várias partes do mundo, ensejando a necessidade de conhecer o perfil de nascimentos e óbitos por essa patologia, nas unidades de atendimento.

Na maternidade pública que atende gestantes de alto risco no estado de Sergipe, a incidência dessa patologia está bem acima do que foi previamente estratificado para a região, bem como sua distribuição espacial ocorre de maneira inexplicável, se considerada a lógica puramente demográfica; por outro lado, a taxa de mortalidade encontrada foi notadamente menor que a esperada.

Os achados quanto à tendência de aumento da incidência de gastrosquise, sua associação com a alta taxa de prematuridade, fatores socioeconômicos, menor idade materna e baixo peso ao nascimento estão alinhados aos dados encontrados em literatura.

Esforços devem ser focados na padronização dos cuidados pré-natais e pós-natais, para um melhor prognóstico e manejo da gastrosquise, com vistas a modificar os fatores que ainda impactam a sua taxa de mortalidade.

Agradecimentos

À Dra. Marcia Montalvão e Dra. Simone M. de Oliveira, pelas contribuições e sugestões que enriqueceram sobremaneira o trabalho.

À Maternidade Nossa Senhora de Lourdes, aos pacientes e seus familiares.

Referências

- Amorim, M. M. R. de, Vilela, P. C., Santos, L. C., Falbo Neto, G. H., Lippo, L. A. M., & Marques, M. (2000). Gastrosquise: Diagnóstico Pré-natal x Prognóstico Neonatal. *Revista Brasileira de Ginecologia e Obstetrícia*, 22(4). <https://doi.org/10.1590/S0100-72032000000400002>
- Benjamin, B. G., Ethen, M. K., Van Hook, C. L., Myers, C. A., & Canfield, M. A. (2009). Gastroschisis prevalence in Texas 1999–2003. *Birth Defects Research Part A: Clinical and Molecular Teratology*, NA-NA. <https://doi.org/10.1002/bdra.20642>
- Bhat, V., Moront, M., & Bhandari, V. (2020). Gastroschisis: A State-of-the-Art Review. *Children*, 7(12), 302. <https://doi.org/10.3390/children7120302>
- Bradnock, T. J., Marven, S., Owen, A., Johnson, P., Kurinczuk, J. J., Spark, P., Draper, E. S., Knight, M., & on behalf of BAPS-CASS. (2011). Gastroschisis: One year outcomes from national cohort study. *BMJ*, 343(nov15 2), d6749–d6749. <https://doi.org/10.1136/bmj.d6749>
- Calcagnotto, H., Müller, A. L. L., Leite, J. C. L., Sanseverino, M. T. V., Gomes, K. W., & Magalhães, J. A. de A. (2013). Fatores associados à mortalidade em recém-nascidos com gastrosquise. *Revista Brasileira de Ginecologia e Obstetrícia*, 35(12), 549–553. <https://doi.org/10.1590/S0100-72032013001200004>
- Castilla, E. E., Mastroiacovo, P., & Orioli, I. M. (2008). Gastroschisis: International epidemiology and public health perspectives. *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics*, 148C(3), 162–179. <https://doi.org/10.1002/ajmg.c.30181>
- Centofanti, S. F., Francisco, R. P. V., Phillippi, S. T., Galletta, M. A. K., Sousa, A. M. S., Rodrigues, A. S., Curi, R., & Brizot, M. L. (2019). Maternal nutrient intake and fetal gastroschisis: A case-control study. *American Journal of Medical Genetics Part A*, 179(8), 1535–1542. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.61265>
- Diyaolu, M., Wood, L. S., & Bruzoni, M. (2021). Sutureless closure for the management of gastroschisis. *Translational Gastroenterology and Hepatology*, 6, 31–31. <https://doi.org/10.21037/tgh-20-185>
- Emil, S. (2018). Surgical strategies in complex gastroschisis. *Seminars in Pediatric Surgery*, 27(5), 309–315. <https://doi.org/10.1053/j.sempedsurg.2018.08.003>
- Feldkamp, M. L., Reefhuis, J., Kucik, J., Krikov, S., Wilson, A., Moore, C. A., Carey, J. C., & Botto, L. D. (2008). Case-control study of self reported genitourinary infections and risk of gastroschisis: Findings from the national birth defects prevention study, 1997–2003. *BMJ*, 336(7658), 1420–1423. <https://doi.org/10.1136/bmj.39567.509074.25>
- Guerra, F. A. R., Llerena Jr, J. C., Gama, S. G. N. da, Cunha, C. B. da, & Theme Filha, M. M. (2008). Defeitos congênitos no Município do Rio de Janeiro, Brasil: Uma avaliação através do SINASC (2000–2004). *Cadernos de Saúde Pública*, 24(1), 140–149. <https://doi.org/10.1590/S0102-311X2008000100014>
- Hunter, A. G. W., & Stevenson, R. E. (2008). Gastroschisis: Clinical presentation and associations. *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics*, 148C(3), 219–230. <https://doi.org/10.1002/ajmg.c.30178>
- Jeong, S.-Y., Kim, B.-Y., & Yu, J. E. (2010). De Novo Pericentric Inversion of Chromosome 9 in Congenital Anomaly. *Yonsei Medical Journal*, 51(5), 775. <https://doi.org/10.3349/ymj.2010.51.5.775>
- Kirby, R. S., Marshall, J., Tanner, J. P., Salemi, J. L., Feldkamp, M. L., Marengo, L., Meyer, R. E., Druschel, C. M., Rickard, R., & Kucik, J. E. (2013). Prevalence and Correlates of Gastroschisis in 15 States, 1995 to 2005. *Obstetrics & Gynecology*, 122(2), 275–281. <https://doi.org/10.1097/AOG.0b013e31829cbbb4>
- Lap, C. C. M. M., Brizot, M. L., Pistorius, L. R., Kramer, W. L. M., Teeuwen, I. B., Eijkemans, M. J., Brouwers, H. A. A., Pajkrt, E., van Kaam, A. H., van Scheltema, P. N. A., Eggink, A. J., van Heijst, A. F., Haak, M. C., van Weissenbruch, M. M., Sleeboom, C., Willekes, C., van der Hoeven, M. A., van Heurn, E. L., Bilardo, C. M., ... Manten, G. T. R. (2016). Outcome of isolated gastroschisis; an international study, systematic review and meta-analysis. *Early Human Development*, 103, 209–218. <https://doi.org/10.1016/j.earlhumdev.2016.10.002>
- Luquetti, D. V., & Koifman, R. J. (2011). Surveillance of birth defects: Brazil and the US. *Ciência & Saúde Coletiva*, 16(suppl 1), 777–785. <https://doi.org/10.1590/S1413-81232011000700008>
- Merks, J. H. M., van Karnebeek, C. D. M., Caron, H. N., & Hennekam, R. C. M. (2003). Phenotypic abnormalities: Terminology and classification. *American Journal of Medical Genetics*, 123A(3), 211–230. <https://doi.org/10.1002/ajmg.a.20249>

- Nazer Herrera, J., Karachon Essedin, L., Cifuentes Ovalle, L., & Assar Cuevas, R. (2016). Gastrosquisis: ¿una pandemia con tasas en aumento? Experiencia del estudio colaborativo latino americano de malformaciones congénitas (ECLAMC) en Chile. Período 1982-2014. *Revista Chilena de Pediatría*, 87(5), 380–386. <https://doi.org/10.1016/j.rchipe.2016.06.003>
- Poulain, P., Milon, J., Frémont, B., Proudhon, J.-F., Odent, S., Babut, J.-M., Le Marec, B., Grall, J.-Y., & Giraud, J.-R. (1994). Remarks about the prognosis in case of antenatal diagnosis of gastroschisis. *European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology*, 54(3), 185–190. [https://doi.org/10.1016/0028-2243\(94\)90280-1](https://doi.org/10.1016/0028-2243(94)90280-1)
- Sbragia Neto, L., Melo Filho, A. A., Barini, R., Huguete, P. R., Marba, S., & Bustorff-Silva, J. M. (1999). Importância do diagnóstico pré-natal de gastrosquise. *Revista Brasileira de Ginecologia e Obstetrícia*, 21(8). <https://doi.org/10.1590/S0100-72031999000800008>
- Severino, A. J. (2017). *Metodologia do trabalho científico*. Cortez Editora.
- Vilela, P. C., Amorim, M. M. R. de, Falbo Neto, G. H., Santos, L. C., Santos, R. V. H., & Correia, C. (2002). Fatores prognósticos para óbito em recém-nascidos com gastrosquise. *Acta Cirúrgica Brasileira*, 17(suppl 1), 17–20. <https://doi.org/10.1590/S0102-86502002000700005>
- Vu, L. T., Nobuhara, K. K., Laurent, C., & Shaw, G. M. (2008). Increasing Prevalence of Gastroschisis: Population-based Study in California. *The Journal of Pediatrics*, 152(6), 807–811. <https://doi.org/10.1016/j.jpeds.2007.11.037>
- West, K. W., Rescorla, F. J., Scherer, L. R., & Grosfeld, J. L. (1995). Diagnosis and treatment of symptomatic breast masses in the pediatric population. *Journal of Pediatric Surgery*, 30(2), 182–187. [https://doi.org/10.1016/0022-3468\(95\)90557-X](https://doi.org/10.1016/0022-3468(95)90557-X)